



TITLE:

後腹膜腔に発生した成人成熟奇形腫の1例

AUTHOR(S):

高木, 公暁; 前川, 由佳; 蓑島, 謙一; 山羽, 正義; 加藤, 俊男; 横井, 繁明; 堀江, 正宣

CITATION:

高木, 公暁 ...[et al]. 後腹膜腔に発生した成人成熟奇形腫の1例. 泌尿器科紀要 2017, 63(11): 475-478

ISSUE DATE:

2017-11-30

URL:

https://doi.org/10.14989/ActaUrolJap_63_11_475

RIGHT:

許諾条件により本文は2018/12/01に公開

腹膜腔に発生した成人成熟奇形腫の1例

高木 公暁¹, 前川 由佳¹, 蓑島 謙一¹, 山羽 正義¹
加藤 俊男², 横井 繁明³, 堀江 正宣¹

¹大雄会第一病院泌尿器科, ²総合大雄会病院臨床病理科, ³岐阜大学医学部附属病院泌尿器科

A CASE OF ADULT MATURE TERATOMA LOCATED IN RETROPERITONEUM

Kimiaki TAKAGI¹, Yuka MAEKAWA¹, Kenichi MINOSHIMA¹, Masayoshi YAMAHA¹,
Toshio KATO², Shigeaki YOKOI³ and Masanobu HORIE¹

¹The Department of Urology, Daiyukai Daiichi Hospital

²The Department of Pathology, Daiyukai Hospital

³The Department of Urology, Gifu University Hospital

A 35-year-old man was referred to our hospital for treatment of a right adrenal tumor detected by ultrasonography during a physical check-up. Contrast-enhanced abdominal computed tomography revealed a poorly enhanced 74 mm tumor situated adjacent to the upper pole of the right kidney. The tumor consisted of fat with peripheral calcification. Magnetic resonance imaging also revealed a right retroperitoneal tumor with fatty contents and well-circumscribed capsule. The endocrine examination revealed the tumor as non-functioning. These findings were suggestive of a right adrenal myelolipoma. We performed laparoscopic right adrenalectomy because of its large size and malignant potency. The pathological examination revealed the retroperitoneal tumor as a mature teratoma existing apart from the adrenal gland. Primary retroperitoneal teratomas are relatively rare. Herein, we report this case of adult mature teratoma occurring in the retroperitoneum.

(Hinyokika Kiyo 63 : 475-478, 2017 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_63_11_475)

Key words : Mature teratoma, Retroperitoneal tumor

緒 言

成人の後腹膜腔に発生する成熟奇形腫は比較的稀である。今回われわれは健診にて発見され副腎骨髄脂肪腫の術前診断のもと腹腔鏡下副腎摘除術を施行したところ病理診断は成熟奇形腫であった1例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 35歳, 男性

主 訴 : 特になし

既往歴 : 小児喘息

現病歴 : 2015年9月健康診断の腹部超音波検査にて右腎の頭側に腫瘍性病変を認めたため当科へ紹介受診となった。

現 症 : 身長 168 cm, 体重 52.1 kg, BMI 18.5, 血圧 117/51 mmHg, 脈拍73回/分

末梢血, 一般生化学的検査 : 特に異常所見を認めない。

内分泌学的検査 : 尿中 VMA 定性 (-), 副腎皮質刺激ホルモン 16.8 pg/ml (7.2~63.3), 血中アルドステロン 107.3 pg/ml (29.9~159), コルチゾール 10.8 µg/dl (4.5~21.1), レニン活性 2.4 ng/ml/hr

(0.5~2.9), アドレナリン 0.02 ng/ml (<100), ノルアドレナリン 0.08 ng/ml (0.15~0.57), ドーパミン <0.02 ng/ml (<0.02)。特にホルモン活性を認めなかった。

画像所見 : 造影 CT (Fig. 1) にて右腎頭側に肝下面に接する長径 74 mm の腫瘍を認める。腫瘍内部は分葉状の充実成分を含み脂肪成分がその周囲を大きく占める。腫瘍の境界は明瞭で辺縁に一部石灰化を伴う。腫瘍内部の造影効果は乏しい。造影 MRI (Fig. 2) にても同様に同腫瘍内部の造影効果は乏しかった。腫瘍辺縁は被膜様の構造が確認され境界は明瞭であった。腫瘍内部の充実性成分は T1 強調像にて軽度低信号, T2 強調像にて軽度高信号, 拡散強調像で高信号を示した。

以上の所見から非機能性の副腎腫瘍, 特に副腎骨髄脂肪腫と考えた。腫瘍の大きさから手術適応と考え腹腔鏡下腫瘍摘出術を施行した。

手術所見 : Fig. 3 に示すようにポートを設置し, 経腹的アプローチにて手術を施行した。腫瘍周囲に特に強固な癒着, 浸潤の所見は認めず剥離は特に問題なく行えた。腫瘍の頭側で腫瘍に圧排されるように正常な副腎組織が確認されたが腫瘍との発生や浸潤などの関係性が明らかではなかったため副腎組織を含めて腫瘍

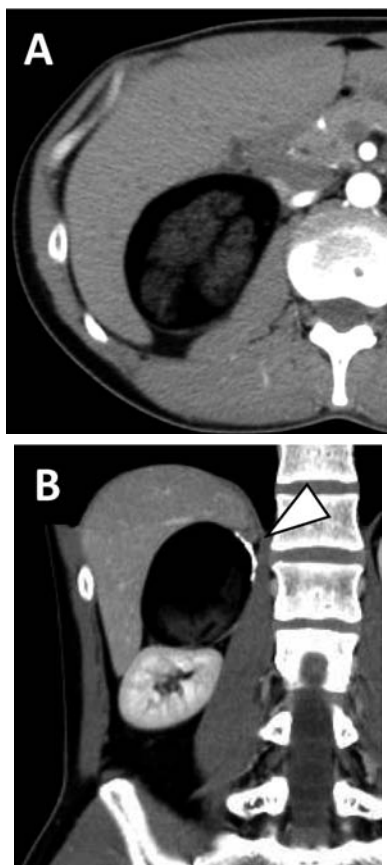


Fig. 1. Enhanced CT shows retroperitoneal tumor contacting with superior pole of right kidney and under surface of liver. The tumor has site of calcification (\triangle).

を摘出した。手術時間は2時間41分、気腹時間は2時間1分、出血量は15gで輸血は施行せず。

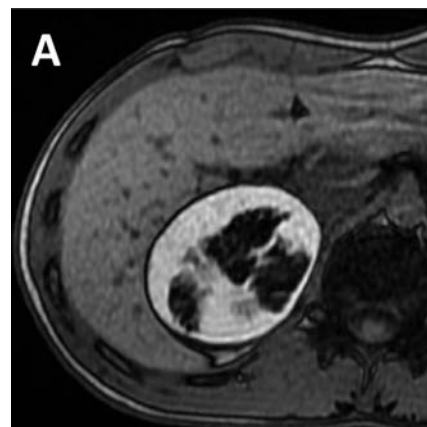
摘出標本：標本重量110g、長径8cm程の被膜に包まれた球形の腫瘍で被膜を切開すると内部に黄色の粥状腫瘍を認め、毛髪成分が含まれていた (Fig. 4)。

病理組織学的所見：腫瘍の内壁は菲薄化した角化を伴う扁平上皮、および線毛円柱上皮の被覆を認める。壁内には毛包、脂腺、導管、平滑筋、脂肪織を認め成熟奇形腫の所見。精巣、卵巣など胚細胞を示唆する組織は確認されず、神経外胚葉成分を認めない。悪性を示唆する異形細胞は認めない (Fig. 5)。副腎は正常であり、奇形腫とも移行像は認めずそれぞれ由来は異なるものと考えられる。

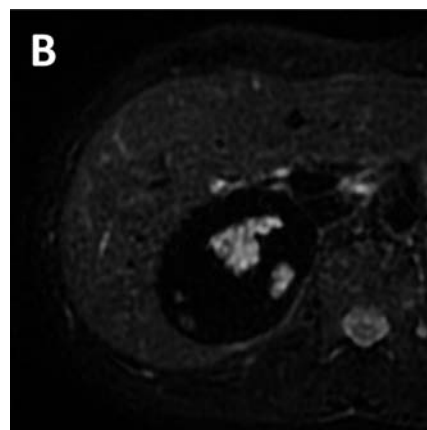
術後経過：術後特に合併症は認めず経過良好であり術後8日目に退院となった。術後に確認した腫瘍マーカーはそれぞれLDH 183 U/l (120~240)、AFP 2.9 ng/ml (<10)、HCG- β <0.1 ng/ml (<0.1)と異常値は認めなかった。両側精巣は視触診、超音波検査にて特に異常所見を認めなかった。

考 察

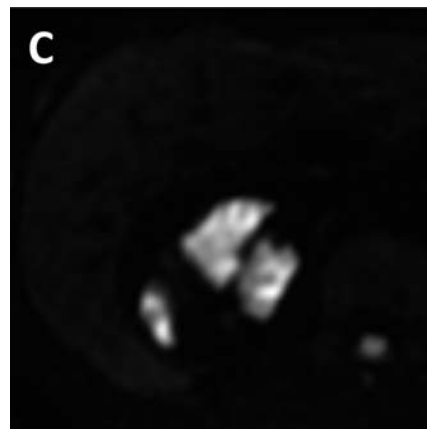
奇形腫は種々の分化段階の胚細胞を発生母地とする



T1 weighted image



T2 weighted image fatsat



diffusion weighted image

Fig. 2. Enhanced MRI revealed the tumor containing adipose tissue and solid part showed high-intensity on DWI.

胚細胞腫瘍の分類の1つであり、内・中・外の三胚葉成分を含む腫瘍とされる。主に生殖器で発生するものが多く、後腹膜での発生は奇形腫全体の6%と比較的稀¹⁾である。また後腹膜腫瘍全体のうち奇形腫は1~11%であり新生児や若年での発症例が多く、本症例のように成人での発症例は稀²⁻⁴⁾である。

後腹膜奇形腫の成人例では約25.8%で悪性化が認められるとの報告⁵⁾もあり外科的切除が原則とされている。良性的奇形腫では通常本症例と同様に症状は伴

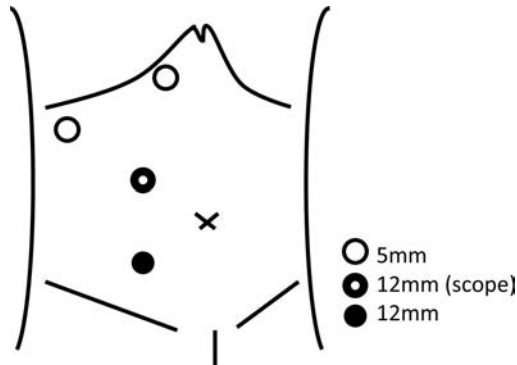


Fig. 3. A picture showing port placement for the laparoscopic surgery.



Fig. 4. Macroscopic finding of the surgical specimen. The divided face of tumor was atheromatous lesion and there were some hairs in the content.

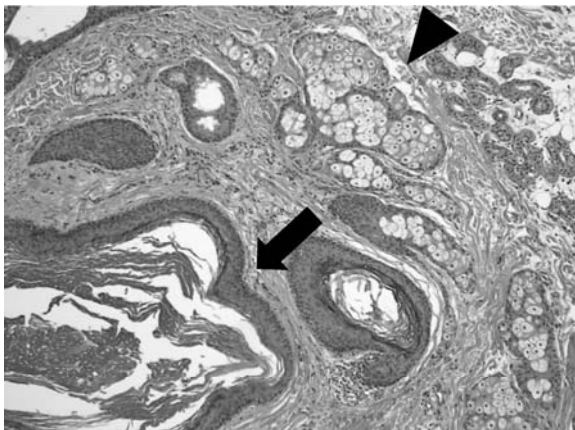


Fig. 5. Histopathological appearance (×10). Sebaceous gland (▲) and epidermis (arrow) were found in the tissue.

わず偶然発見される例が多いが、悪性のものは進行が早く腹痛や腹部腫瘍、嘔吐などの消化器症状を伴って発症する傾向がある。

胚細胞性腫瘍が後腹膜へ転移を来すことは稀ではなく、原発性の後腹膜奇形腫であるかは全身を検索し

Table 1. Characteristics of imaging findings between teratoma and myelolipoma

CT 所見	奇形腫	骨髄脂肪腫
脂肪成分の比率	50%程度	80%以上を占める
軟部組織の比率	一般的に20-30%	20%前後にとどまる
石灰化	大きいものが多い	点状・斑状のものが多い

て確認する必要がある。本症例においては術前の胸部腹部骨盤 CT 検査にて他の原発巣は認めず、また術後病理診断が判明してから精巣の超音波検査を行ったが特に異常所見を認めず原発性の後腹膜奇形腫と診断した。腫瘍マーカーに関しては alpha-fetoprotein (AFP) が未熟奇形腫において上昇する例があり、AFP が異常値である場合は悪性腫瘍の可能性が考えられるが Billmire ら⁶⁾は小児に発症した奇形腫142例の検討で悪性奇形腫の100%、未熟奇形腫の50%、成熟奇形腫の6%で AFP 上昇がみられたとしている。本症例では AFP は術後に実施した検査であり、腫瘍切除に伴い正常化したものかもともと正常値であったのかは不明であるが、術前に奇形腫も念頭に置いて AFP を測定すべきであった。

本症例は術前に画像所見から骨髄脂肪腫と考えられたが過去に骨髄脂肪腫と後腹膜奇形腫を比較した検討⁷⁾をみると、典型的な奇形腫であれば画像所見から骨髄脂肪腫との鑑別は十分可能であるとされる。奇形腫と骨髄脂肪腫の CT 所見の特徴について表にまとめた (Table 1)。骨髄脂肪腫では脂肪成分が80%以上を占めるのに対して奇形腫は多くても50%程度であり、軟部組織の比率は奇形腫の方が多くとされ、また石灰化に関して骨髄脂肪腫では点状の石灰化が多くみられるが奇形腫では大きな石灰化がみられるとされる。それらの点を見ると本症例では脂肪成分は多く、石灰化はごく一部に限定されているものであり特徴的には骨髄脂肪腫と思われた。やはり診断のためにも外科的切除術は必要であると考えられた。

後腹膜原発腫瘍の症例を長期経過観察した報告⁸⁾では、良性腫瘍の切除後の5年生存率は100%であるとされている。しかし、成熟奇形腫では3~6%の症例に悪性転化を認めるため密な経過観察を推奨する報告⁹⁾もあり注意が必要である。成熟奇形腫の悪性転化に関しては年齢50歳以上で、腫瘍径も10cmを超えるものが多くみられている¹⁰⁾。当初画像診断から悪性所見を認めない成熟奇形腫と診断され、10年後に悪性転化が認められた症例報告¹¹⁾もあり、筆者らは悪性転化はゆっくり起こるものと考えられると述べている。後腹膜腔では他の臓器と接さないため症状を起こしにくく、腫瘍径が大きくなないと発見されにくい。そのため成人例では他の契機で偶然発見される症

例が多いようである。一方若年例では腹部膨隆や背部痛、嘔吐などの消化器症状から発症する症例が多い。若年時より存在した奇形腫が症状を出さないまま長期間経過することで悪性転化を来とし、成人で発見されている可能性も否定できない。本症例も健診にて偶然発見され、腫瘍径も大きいものであり若年時より奇形腫が存在していた可能性が考えられる。今後も悪性転化がありうることを念頭に経過観察を行っていく方針である。

結 語

成人に発見された後腹膜原発成熟奇形腫の1例を経験した。後腹膜に発生する腫瘍として各種画像診断も踏まえて成熟奇形腫も鑑別すべき疾患であると考えられた。

文 献

- 1) Pack GT and Tabah EJ: Collective review-primary retroperitoneal tumors-a study of 120 cases. *Int Abstr Surg* **99**: 209-231, 1954
- 2) Gschwend J, Burk TW, Woodward JE, et al.: Retroperitoneal teratoma presenting as an abdominal-pelvic mass. *Obstet Gynecol* **70**: 500-502, 1987
- 3) Lane RH, Stephens DH and Reiman HM: Primary retroperitoneal neoplasms: CT findings in 90 cases with clinical and pathologic correlation. *AJR Am J Roentgenol* **152**: 83-89, 1989
- 4) Wang RM and Chen CA: Primary retroperitoneal teratoma. *Acta Obstet Gynecol Scand* **79**: 707-708, 2000
- 5) Bruneton JN, Diard F, Drouillard JP, et al.: Primary retroperitoneal teratoma in adults-presentation of two cases and review of the literature. *Radiology* **134**: 613-616, 1980
- 6) Billmire DF and Grosfeld JL: Teratomas in childhood: analysis of 142 cases. *J Pediatr Surg* **21**: 548-551, 1986
- 7) 湯村 寧, 千葉喜美男, 漆原正泰, ほか: 副腎骨髄脂肪腫と鑑別困難であった後腹膜奇形腫の1例. *泌尿紀要* **46**: 891-894, 2000
- 8) Pinson CW, ReMine SG, Fletcher WS, et al.: Long-term results with primary retroperitoneal tumors. *Arch Surg* **124**: 1168-1173, 1989
- 9) Okulu E, Ener K, Aldemir M, et al.: Primary mature cystic teratoma mimicking an adrenal mass in an adult male patient. *Korean J Urol* **55**: 148-151, 2014
- 10) Hackethal A, Brueggmann D, Bohlmann MK, et al.: Squamous-cell carcinoma in mature cystic teratoma of the ovary: systematic review and analysis of published data. *Lancet Oncol* **9**: 1173-1180, 2008
- 11) Jitumoto M, Munakata S and Yamamoto T: Malignant transformation of mature cystic teratoma diagnosed after a 10-year interval. *Case Rep Obstet Gynecol* ID2947927, 4 pages, 2017

(Received on March 27, 2017)
(Accepted on July 18, 2017)